



TITLE:

睾丸腫瘍(胎児癌)における原発巣自然退縮と考えられる1例

AUTHOR(S):

島田, 憲次; 岡本, 新司; 島, 博基; 生駒, 文彦; 植松, 邦夫; 小川, 隆敏

CITATION:

島田, 憲次 ...[et al]. 睾丸腫瘍(胎児癌)における原発巣自然退縮と考えられる1例. 泌尿器科紀要 1981, 27(5): 537-541

ISSUE DATE:

1981-05

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/122885>

RIGHT:

睪丸腫瘍（胎児癌）における原発巣自然退縮と 考えられる1例

兵庫医科大学泌尿器科学教室（主任：生駒文彦教授）

島 田 憲 次
岡 本 新 司
島 博 基
生 駒 文 彦

（同 病院病理）

植 松 邦 夫

（社会保険紀南総合病院泌尿器科）

小 川 隆 敏

A CASE OF THE BURNED OUT TESTICULAR GERM CELL TUMOR

Kenji SHIMADA, Sinji OKAMOTO, Hiroki SHIMA and Fumihiko IKOMA

From the Department of Urology, Hyogo College of Medicine

(Director: Prof. F. Ikoma)

Kunio UEMATSU

From the Department of Pathology (Hospital), Hyogo College of Medicine

Takatoshi OGAWA

From the Department of Urology, Kinan Sogo Hospital

An autopsy case of burned out testicular germ cell tumor in a 27-year-old man was reported. The patient complained of severe abdominal pain on the left side. Clinical examination and laparotomy established the diagnosis of retroperitoneal germ cell tumor. The testes were normal on palpation up to his death. At autopsy, however, a small red focus was found on the tunica albuginea of his left testis. Careful histological examination showed small fibrous scar containing hyalinized seminiferous tubules, hemosiderin deposits and peculiar hematoxylin-staining substances. This finding strongly suggests the spontaneous regression of the primary germ cell tumor in the testis.

緒 言

後腹膜は睪丸腫瘍のリンパ節転移が好発する部位である。一方、後腹膜の異所性睪丸組織が発見されて以来¹⁾、睪丸に異常を認めない後腹膜原発の生殖細胞腫瘍の報告をみるようになった。後腹膜の腫瘍が原発性か転移性かの診断は最終的には両側睪丸の組織学的精査を待たねばならない。しかし、生殖細胞腫瘍が若・

中年男子に好発することから、症例によっては単に診断をつけるための除睪術には反対の意見もみられ、原発巣についての検索が不十分な報告も多い。

今回われわれは生前、臨床上睪丸には何ら異常が認められず、原発性後腹膜生殖細胞腫瘍と考えられていた症例の剖検の結果、1側睪丸に腫瘍の自然退縮と見なされる病理組織学的所見を得たので報告する。

症 例

27歳男子.

主訴：左側腹部・腰部痛.

既往歴：3歳時に小児麻痺罹患，その後左下肢短縮.

家族歴：特記すべき事項なし

現病歴：1978年9月頃より上腹部不快感が出現したが，消化管レ線検査では異常を指摘されなかった．同年10月に入り，2～3日間隔で左側腹部・腰部に強度の疼痛を訴えるようになり，12月の静注性腎盂レ線像で左腎の異常を指摘され当科へ入院した．

入院時現症：体格中等度，栄養やや不良，体温 38.0 °C，脈拍80回/分整，血圧 100/70 mmHg，貧血，黄疸は認めず．胸部，腹部は理学的検査にて異常所見を認めず．両側睪丸は触診上異常を認めず．

入院時検査成績（1978年12月）

赤沈：1時間値 57 mm，2時間値 94 mm.

血液所見：RBC $452 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，Hb. 13.8 g/dl，WBC $9900/\text{mm}^3$ ，血小板 $27.6 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，出血，凝固時間異常認めず．

血液化学：血清電解質異常認めず，総蛋白 6.6 g/dl，GOT 12 u，GPT 12 u，LDH 1430 U，総ビリルビン 0.5 mg/dl，BUN 10 mg/dl，クレアチニン 0.8 mg/

dl，C.Cr 76 ml/min，AFP 2.5 ng/ml，CEA 1 ng/ml 以下．

血清学的検査：CRP 6(+)，ASLO 20 u，RA(+).

尿検査：RBC 4～5/F，WBC 5～10/F，たん白 trace，糖（-）．

静注性腎盂レ線像（Fig. 1）：左腎盂腎杯尿管の左排，狭小化を認める．

血管造影：腹部大動脈造影では左腎上極から中央部に hypovascular area を認める．下大静脈造影（Fig. 2）では右総腸骨静脈の内腸骨静脈分岐部より両腎静脈分岐部まで完全閉塞しており，著明な側副血行路の発達がみられた．

腹部 CT では左腎門部より骨盤内にかけて境界不鮮明な腫瘍陰影を認めた．

注腸造影では異常を認めなかった．

以上の諸検査成績より，在腎から骨盤内に広がる後腹膜腫瘍の診断のもとに，1979年1月22日，全身麻酔下に開腹手術を施行した．

手術所見：後腹膜腔は，右腎門部および左腎上極部より骨盤内に致る巨大な灰白色弾性硬の腫瘍で占められていた．腹部大動脈は腫瘍中に拍動が触知できたが，下大静脈は両総腸骨動脈より完全閉塞をきたしており，多数の副血行路が形成されていた．腫瘍摘出は



Fig. 1. Excretory urogram shows compression and narrowing of the left ureter and pelvicalyceal system.

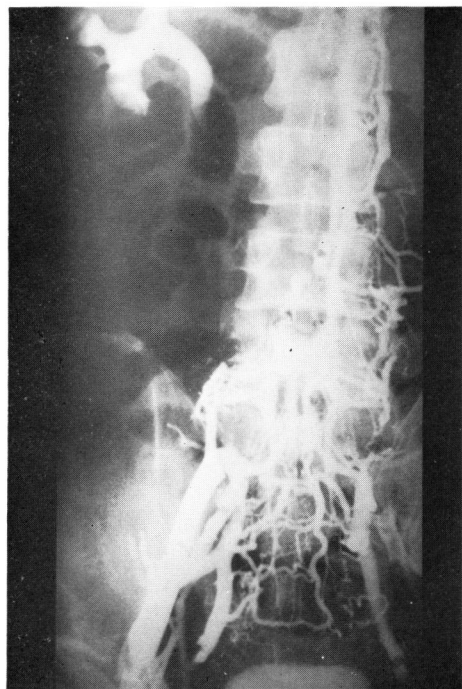


Fig. 2. Venogram shows complete occlusion of the inferior vena cava and multiple collaterals.

不可能と判断し、数カ所より生検を行なうにとどめた。

生検標本の組織学的検索では性腺外 seminoma が強く疑われたため放射線療法を開始したが、その後も強い疼痛が持続し、胸部レ線像上腫瘍転移を疑わせる陰影が出現した。3月に入り cis-DDP 使用開始したところ、全身症状の著明な改善、胸部腫瘍陰影の縮少をみたため、一時軽快退院した。1979年7月末に左下肢および前胸部激痛、悪心嘔吐、腹壁静脈怒張などの症状が出現したため当科再入院した。肝は右肋骨下4横指まで腫大し、シンチグラムにて肝右葉に space occupying lesion を認めた。血液検査所見では軽度の貧血、低蛋白血症のほか、血中 AFP 376 ng/ml, LDH 3200 u と高値を示していた。入院後ただちに

cis-DDP 再投与し、全身状態の一時改善をみたが、次第に貧血が進行し、胸部レ線像での腫瘍陰影増加、腎機能低下をきたした。患者の希望により紀南総合病院に移られたが、全身状態漸次悪化し、1980年2月5日永眠された。

剖検所見：後腹膜腫瘍の頭側は両腎上極にまで及び、両大血管、両側尿管も膠様硬の腫瘍に埋没されていた。尾側は膀胱周囲、ダグラス窩にも腫瘍が充満していた。転移は両肺に径 1.5~3.0 cm の黄灰色結節を多数、肝右葉横隔膜面に径 15 cm の病巣1カ所、および腸間膜リンパ節に小病巣数個を認めた。睾丸は両側ともに 25 gr で、左睾丸白膜に径 5 mm の赤色斑を認めた以外は腫瘍、硬結などの変化は見られなかった。

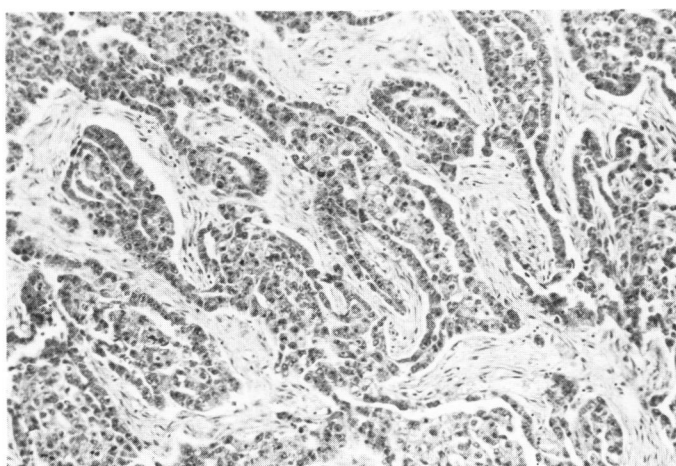


Fig. 3. The tumor shows epithelioid structures with the large and pleomorphic cells. The histological diagnosis is embryonal carcinoma. (H. & E. $\times 100$).

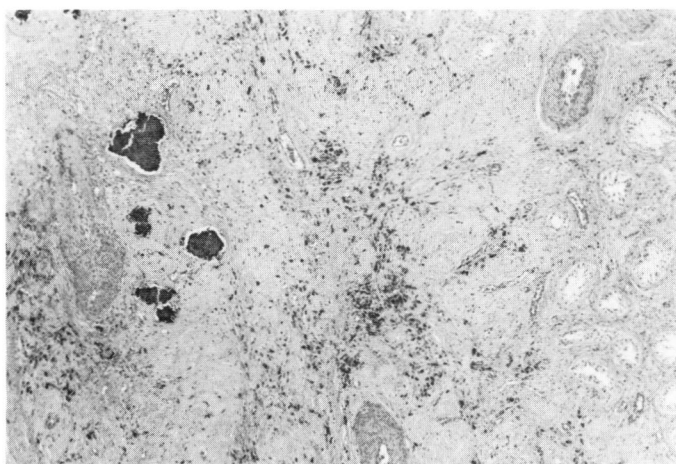


Fig. 4. A scar of the left testis contains hyalinized seminiferous tubules, numerous siderophages and hematoxylin-staining bodies (H. & E. $\times 40$).

組織学的所見：後腹膜腫瘍は中心部がほとんどすべて壊死に陥り、周囲の厚い線維化組織中に腫瘍細胞をわずかに認めるのみであった。腫瘍細胞は細胞質、核ともに大きく、多形成を示し、一部で上皮様配列のみられる胎児癌であった (Fig. 3)。肺、肝の転移巣にも同様の所見がみられた。両側睪丸はそれぞれ serial section で標本を作製した。とくに左睪丸の赤色斑点部では連続切片を作製し検索したところ、同部は rete testis より連続性のある瘢痕組織で置換されており、硝子化した精細管、豊富なヘモジデリン沈着が認められた。瘢痕組織のほぼ中央に位置して HE 染色にてヘマトキシリン好染性な径約 200~300 μ の一部顆粒状の小体がみられた (Fig. 4)。同小体は Kossa 鍍銀法にてカルシウムの沈着がその一部に証明された。また、同小体周辺には鍍銀染色法にて基底膜様構造を認めた。瘢痕組織中には腫瘍細胞は認められなかった。睪丸の他の部位は精細管の萎縮、間質の増殖以外には著変を認めなかった。

考 察

生殖細胞起源の腫瘍が性腺以外の部位に発生したものを性腺外生殖細胞腫瘍 extragenital germ cell tumor と呼ぶ。発生頻度は非常に稀で、生殖細胞腫瘍の約 1% といわれている²⁾。腫瘍発生部位としては前縦隔、後腹膜、松果体³⁾が多く、その他膀胱⁴⁾、前立腺⁵⁾、胃⁶⁾、胸腺⁷⁾などの報告がみられる。このなかで前縦隔腫瘍として Utz (1971) が 12 例⁸⁾、Molina (1965) が 35 例⁹⁾を集計している。後腹膜腫瘍としては Abell (1965) が 16 例¹⁰⁾、Utz が 5 例⁹⁾、Houston (1971) は自験例を加え文献上 36 例を集計し報告している¹¹⁾。

腫瘍の組織型をみれば、前縦隔では seminoma がほとんどを占め、後腹膜では seminoma と並び胎生癌の報告も多い。その他、絨毛癌、奇形癌¹²⁾の報告もみられる。

性腺外生殖腫瘍の発生に関しては、現在つぎの 3 つの考え方がみられる。

(1) 原発性性腺外生殖細胞腫瘍：生殖細胞が卵黄内胚葉 yolk sac entoderm より性腺原基中に移動する途中で他の部位に迷入し、それが腫瘍化したと考えるもの。腫瘍発生部位が松果体、前縦隔、後腹膜のごとく正中線上に位置しており、小児における奇形腫群腫瘍の発生と同様の機序が推測されている。

(2) 転移性腫瘍で、検索不十分のため睪丸原発巣が発見されなかったもの：文献上報告のみられる性腺外生殖細胞腫瘍のなかには、単に触診所見のみで睪丸

は正常と判断された症例が少なからずみられる。このなかには睪丸原発巣が非常に小さいために理学的検査のみでは異常が発見できなかった症例も含まれている可能性が強く、事実、経過観察中に睪丸腫瘍が顕著となった報告もみられる¹³⁾。これまでの報告例中、睪丸の組織学的精査が可能であった症例の多くに生殖細胞腫瘍の小病巣が認められたことより^{13,14)}、原発性性腺外生殖細胞腫瘍の存在そのものに反対の考えもみられる¹⁵⁾。しかし、後腹膜以外の前縦隔、松果体は睪丸腫瘍の転移部位として不合理と考えられ¹⁶⁾、原発性腫瘍発生説のすべてを否定はできないと思われる。

(3) 転移性腫瘍で、睪丸原発性が自然退縮したもの：睪丸は触診上正常あるいは萎縮と診断され、病理組織学的検査の結果、実質の一部に瘢痕組織が発見された症例がみられる。瘢痕組織は外傷あるいは睪丸炎後にもみられる所見のため、これのみでは腫瘍がかつて存在した根拠とはならない¹⁷⁾。しかし、線維化組織中の硝子化した精細管、豊富なヘモグジデリン沈着、そしてことにヘマトキシリン好染性の塊状顆粒状の小体は、後腹膜などに生殖細胞腫瘍の転移巣を有する患者以外の睪丸からは認められていない。また、このようなヘマトキシリン小体と腫瘍細胞が同一精細管中にみられた症例も報告されている¹⁸⁾。ヘマトキシリン好染性小体は組織化学的検索により磷脂質、蛋白分解物、粘液様物質およびリン酸カルシウムを含み、腫瘍細胞が精細管中で壊死に陥った結果形成されたものと推測されている。睪丸にこのような特徴ある瘢痕組織を認めた場合には、生殖細胞腫瘍が自然退縮した burned out testicular tumor と解釈されている¹⁹⁾。

以上をもとにしてわれわれの症例の再検討を行なった。臨床経過中は理学的検査上睪丸には何ら異常が認められなかったが、剖検時には主訴である左側腰部痛と同側の睪丸白膜に小赤斑点がみつつけられた。同部の組織学的検索では瘢痕組織中に硝子化精細管、ヘモジデリン沈着、ヘマトキシリン好染性小体が認められたことは、文献上に記載された“burned out testicular tumor”の所見とよく一致しており、本症例は睪丸原発巣が自然退縮した転移性後腹膜生殖細胞腫瘍とみなすのが妥当と考える。

結 語

臨床経過中は原発性後腹膜生殖細胞腫瘍と診断されていた 27 歳男子症例の剖検の結果、生前には異常が認められなかった 1 側睪丸に腫瘍の自然退縮と考えられる硝子化精細管、ヘモジデリン沈着、ヘマトキシリン好染性小体を含む小瘢痕組織を認めたので報告した。

文 献

- 1) Staemmler, M.: Untersuchungen über über-jährlige Hodenanlagen in der Bauchhöhle. Verhandl. Deutsch. Path. Gesellsch., **27**: 190, 1934.
- 2) Collins, D.H. and Pugh, R.C.B.: Classification and frequency of testicular tumors. Brit. J. Urol., (suppl.) **36**: 1, 1964.
- 3) Simson, L.R., Lampe, I. and Abell, M.R.: Suprasellar germinomas. Cancer, **22**: 533, 1968.
- 4) Hyman, A. and Leiter, H.E.: Extratesticular chorioepithelioma in male probably primary in urinary bladder. J. Mt. Sinai Hosp., **10**: 212, 1943.
- 5) Dvoracek, C.: Primary chorioepithelioma of prostate with gynecomastia. Čas. Lélc. Česk., **88**: 198, 1949.
- 6) Holt, L.P., Melcher, D.E. and Colquhoun, J.: Extragonadal choriocarcinoma in the male. Postgrad. Med. J., **41**: 134, 1964.
- 7) Pugsley, W.S. and Carleton, R.L.: Germinal nature of teratoid tumors of thymus. Arch. Path., **56**: 341, 1953.
- 8) Utz, D.C. and Buscemi, M.F.: Extragonadal testicular tumors. J. Urol., **105**: 271, 1971.
- 9) Molina, C., Mercier, R., DeLage, J. et al.: Les séminomes du médiastin. Sem. Hôp. Paris, **41**: 1416, 1965.
- 10) Abell, M.R., Fayos, J.V. and Lampe, I.: Retroperitoneal germinomas (seminomas) without evidence of testicular involvement. Cancer, **18**: 273, 1965.
- 11) Houston, R.R., Winter, C.C., Smith, J.P. and Brenner, M.A.: Primary retroperitoneal seminoma without gonadal involvement.: A report of 3 cases. J. Urol., **106**: 841, 1971.
- 12) Montague, D.K.: Retroperitoneal germ cell tumors with no apparent testicular involvement. J. Urol., **113**: 505, 1975.
- 13) 井口正典・金子茂男・郡 健二郎・ほか：潜在性睾丸腫瘍の1例。日泌尿会誌, **69**: 117, 1978.
- 14) Asif, S. and Uehling, D.T.: Microscopic tumor foci in testes. J. Urol., **99**: 776, 1968.
- 15) Wegenke, J.D., Chuprevich, T.W. and Nilsson, T.E.G.: Retroperitoneal seminoma. J. Urol., **117**: 262, 1977.
- 16) Maeres, E.M., Jr. and Briggs, E.M.: Occult seminoma of the testis masquerading as primary extragonadal germinal neoplasms. Cancer, **30**: 300, 1972.
- 17) Das, S., Bochetto, J.R. and Alpert, L.I.: Primary retroperitoneal seminoma: Report of a case and review of the literature. Cancer, **36**: 595, 1975.
- 18) Azzopardi, J.G. and Hoffbrand, A.V.: Retrogression in testicular seminoma with viable metastases. J. Clin. Pathol., **18**: 135, 1965.
- 19) Mostofi, F.K. and Price, E.B.: Tumor of the male genital system. 2nd series Fasc., **8**: 80, 1973.

(1980年12月26日受付)